



TITLE:

夜尿症を主訴とした小児先天性尿道狭窄症の3例

AUTHOR(S):

杉元, 幹史; 上田, 修史; 寛, 善行

CITATION:

杉元, 幹史 ...[et al]. 夜尿症を主訴とした小児先天性尿道狭窄症の3例. 泌尿器科紀要 2003, 49(3): 165-168

ISSUE DATE:

2003-03

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/114929>

RIGHT:

夜尿症を主訴とした小児先天性尿道狭窄症の3例

坂出市立病院泌尿器科 (医長: 杉元幹史)

杉元 幹史, 上田 修史

香川医科大学泌尿器科学教室 (主任: 笥 善行教授)

笥 善 行

THREE CASES OF CONGENITAL URETHRAL STRICTURE IN CHILDHOOD

Mikio SUGIMOTO and Nobufumi UEDA

From the Department of Urology, Sakaide Municipal Hospital

Yoshiyuki KAKEHI

From the Department of Urology, Kagawa Medical University

We report three cases of congenital urethral stricture in boys. They were 8, 7 and 5 years old. They complained of enuresis both day and night. Voiding cystography revealed bulbar narrowing (Cobb's Collar) in all cases, and vesico-ureteral reflux (VUR) occurred in two cases (three ureters). Endoscopically this lesion showed ring-form stenosis just distal to the urethral sphincter, and incised by using an infantile urethrotome. After the operation, VUR resolved in two ureters and improved in one. In all cases, daytime enuresis resolved dramatically, and night enuresis became controllable. Congenital urethral stenosis in boys is an important clinical entity in pediatric urology, and is not such a rare disease.

(Acta Urol. Jpn. 49: 165-168, 2003)

Key words: Urethral stricture, Enuresis, Transurethral incision

緒 言

先天性尿道狭窄はかつては稀な疾患であるとされていたが、近年その認識が変わりつつあり小児において重要な疾患の1つであると考えべきものである。最近われわれは夜尿症を主訴として受診した男児に3例の先天性尿道狭窄症を認めたので報告する。

症 例

症例 1

患者: 8歳, 男児

主訴: 昼間, 夜間遺尿症

既往歴 家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 生来よりの昼間および夜間遺尿症にて受診。

画像検査: 排尿時膀胱造影にて外尿道括約筋遠位部に狭窄像あり。両側Ⅱ度のVURを認めた (Fig. 1)。残尿はなかった。IVPでは上部尿路は特に異常はなかった。

治療経過: 抗コリン剤などの薬剤に反応せず2000年1月尿道リング状狭窄症の診断のもと内視鏡的切開術施行。術後3日目に尿道カテーテル抜去。その後は昼間遺尿はほぼ改善, 夜間遺尿も抗コリン剤併用にて一

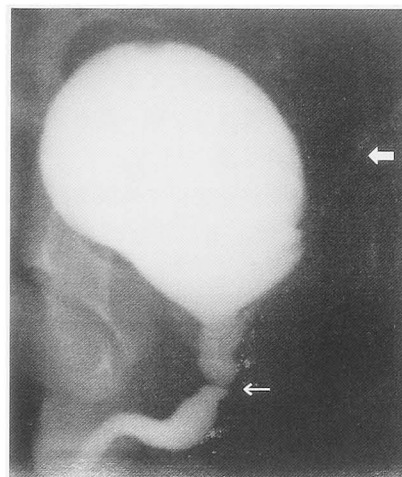


Fig. 1. Voiding cystography revealed bulbar narrowing distal to the urethral sphincter (thin arrow) and bilateral VUR (thick arrow).

時的に改善したものの, 術後約3カ月で術前と同様, 連日の遺尿症が再発してきた。

2000年8月尿道造影にて尿道狭窄再発との診断のもと, 再度切開術施行。膀胱は肉柱形成が軽度存在したが, 三角部の発育, 尿管口の位置は正常であった。外尿道括約筋のすぐ遠位に膀胱を充満させると強調され



Fig. 2. Voiding cystography: right VUR resolved and left improved. Urethral stenosis improved too (arrow).

るリング状狭窄があった。

Olympus 社小児用 resect scope (10 Fr) を用いて cold knife にて12時方向の粘膜を切開するとその下にリング状の線維性組織が確認できた。それを完全に断ち切るように切開し、尿道の拡張を確認して手術終了した。

術後は抗コリン剤併用にて遺尿症はほとんど改善している。術後3カ月目の排尿時膀胱造影で VUR は一側は消失し、もう一側も軽度になっていた。尿道の狭窄部も拡張しており経過は良好である (Fig. 2)。

症例 2

患者：7歳，男児

主訴：生来よりある夜間遺尿と，時々ある昼間遺尿

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：生来よりの遺尿症にて1～2年前より他院小児科などを受診し，抗コリン剤，漢方薬などを処方されるも改善せず当科受診。

画像検査：排尿時膀胱造影にて外尿道括約筋遠位に狭窄像を認め，さらに左側のⅡ度の VUR を伴って

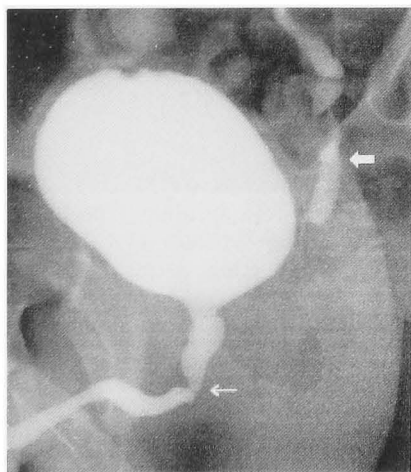


Fig. 3. Voiding cystography revealed bulbar narrowing distal to the urethral sphincter (thin arrow) and lt. grade II VUR (thick arrow).

いた (Fig. 3)。残尿なし。IVP では上部尿路は異常なかった。

治療経過：尿道狭窄症の診断のもと内視鏡的切開術施行。膀胱内は軽度の肉柱形成が存在し，尿道鏡で括約筋遠位に巻き貝状の狭窄を認めた (Fig. 4) ため症例1と同様に切開した。尿道カテーテル抜去後より劇的に昼間遺尿が消失し，夜間遺尿症も1～2週間の経過でほぼ消失した。術後4カ月の排尿時膀胱造影で VUR は消失していた (Fig. 5)

症例 3

患者：5歳，男児

主訴：生来よりの昼間および夜間遺尿

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：生来よりの遺尿症にて当科受診

画像検査：排尿時膀胱造影にて外尿道括約筋遠位に狭窄像を認めた。VUR はなかった。残尿なし。IVP では上部尿路は異常なかった。

治療経過：抗コリン剤などの薬剤に抵抗性であったため尿道狭窄症の診断のもとに内視鏡的切開術施行。膀胱内は軽度に肉柱形成が存在し，尿道鏡で括約筋遠

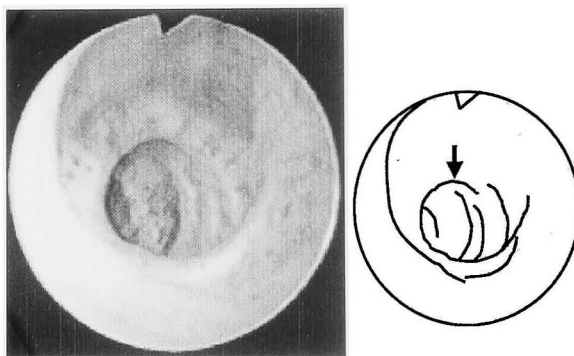


Fig. 4. Endoscopic findings: arrow shows snail form stenosis distal to the urethral sphincter.

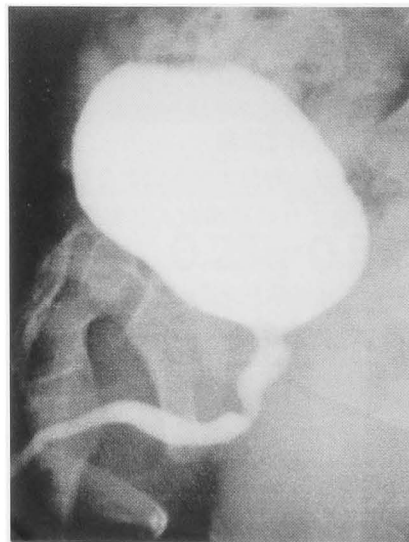


Fig. 5. Voiding cystography: VUR resolved.

位に複数の不完全なリング状狭窄を認めたため同様に切開した。この症例も経過は良好で尿道カテーテル抜去後より劇的に昼間遺尿が消失し、夜間遺尿症も抗コリン剤併用にて1~2週間の経過でほぼ消失した。

考 察

先天性の下部尿路通過障害については尿道弁は有名で、教科書的にも認識されているが先天性尿道狭窄症についてはまだまだその認識度が低いのではないかと考える。アメリカでも非常に稀な疾患であるとされており¹⁾, Gibbons らも小児の尿道狭窄の原因のほとんどは医原性であるとしている^{2,3)}

渡辺らは振子部尿道の先天性狭窄を報告しているが⁴⁾, やはり部位としては括約筋のすぐ遠位の球部尿道が最も多いようである。この部位に多い原因としては発生に起因しており、内胚葉由来の後部尿道と外胚葉由来の前部尿道の接合部でそこがリング状に残るとい説が最も有力である⁵⁾ いわゆる Cobb's collar と言われているものである。その部位は血流支配の関係で線維化しやすいのではないかと考えられている⁶⁾

狭窄によって尿流が乱流、さらには逆流となり膀胱の刺激性の亢進とともに様々な症状を引き起こすと考ええる。

治療は内視鏡的切開術が有効で、森らの小児先天性尿道狭窄226例についての報告では、内視鏡的切開術によって VUR の消失、改善率が自然経過に比べて有意に高く、遺尿症に対しては69.4%の有効性があったとしている。また尿路感染症の予防に対しても有効であったとしており、また決して稀な疾患ではないとも述べている⁷⁾

野々村らは74例の報告で、症状としては尿路感染が最も多く、その53%に VUR を合併していたとしている。内視鏡的切開術後、VUR も、尿路感染も夜尿症、尿失禁もほとんどすべて消失ないし改善したと報告している。しかし overdiagnosis, overtreatment になっているという可能性は否定できないとも述べている⁸⁾

Dewan の報告では1,300例の尿道鏡で、95例に Cobb's Collar を認めたがそのうちの4例だけが切開術が必要な状況であったとしている⁹⁾

Schertz らは夜間のみの遺尿症の症例より昼間、夜間両方の遺尿症の症例のほうが内視鏡的切開術後の改善率が良かったと報告している¹⁰⁾

われわれの3症例も昼間、夜間両方の遺尿症があったため術後の改善が劇的であったのであろう。

Podesta らも尿道狭窄症の症例は以前より報告されているよりかなり多いと言っており、ただ排尿障害が主な症状であるため自分の意志で排尿管理ができるよ

うになる年齢まで発見するのは難しいと述べている¹¹⁾

また兄弟3人に発見された家族内発生の報告もあり¹²⁾, Narborough は他の心血管系, 中枢神経系, 骨格筋系の先天異常を合併することがあり注意が必要であるとしている¹³⁾

診断のポイントはまずこの疾患の存在を知っておくことである。排尿時膀胱造影で本疾患が疑われる場合は、全身麻酔下での内視鏡的観察で確定診断をつける。膀胱を充満させておいて手圧をかけると拡張性の悪い狭窄部位が白く浮き上がってきて切開すべき位置が決定できる。

症例1の症状の再発については最初の切開が浅すぎたものと考ええる。粘膜切開後、すぐ下層に白い線維性のリングが観察でき、それを完全に断ち切るように切開すべきである。切開の方向としてはやはり12時方向が良いと考えるが症例によっては狭窄が完全なリング状ではなく不完全なものや、巻き貝状のものもあるため切開部位は適宜決定すべきであろう。

切開は cold knife のほうが深さを微妙にコントロールできるという点で優れていると言われている⁸⁾ しかし再発を繰り返す場合には hot で切除しているケースもみられる。日常の診療において遺尿症、特に昼間遺尿症を伴い、薬剤に抵抗性のものについては、決して稀ではない本疾患の存在を念頭に置き、排尿時膀胱造影をはじめ種々の精査を施行すべきである。適切な診断とそれに基づく侵襲の少ない手術によって患児にもたらされる恩恵は計り知れないものがあると考ええる。

結 語

夜尿症を主訴として発見された小児先天性尿道狭窄症の3例を報告した。本疾患は決して稀なものではなく、手術の有効性も高いため本疾患の存在を念頭に置き診療にあたるべきであろう。

文 献

- 1) Duckett JW and Snow BW: Disorders of the urethra and penis. In: Campbell's Urology. 5th Ed., pp 2011-2015, Saunders Co. Philadelphia, 1986
- 2) Frank JD, Pocock RD and Stower MJ: Urethral strictures in childhood. Br J Urol **62**: 590-592, 1988
- 3) Gibbons MD, Koontz WW Jr and Smith MJ: Urethral stricture in boys. J Urol **121**: 217-220, 1979
- 4) 渡辺 仁, 尾松 操, 神波照夫, ほか: VUR を伴った先天性尿道狭窄の2例. 泌尿紀要 **36**: 1081-1083, 1990

- 5) Cobb BG: Congenital stricture of the proximal urethral bulb. *J Urol* **99**: 629-631, 1977
- 6) Cranston D, Davies AH and Smith JC: Cobb's collar—a forgotten entity. *Br J Urol* **66**: 294-296, 1990
- 7) 森 義則, 松井孝之, 萩野敏弘, ほか: 小児先天性尿道狭窄 (尿道リング) の治療. 男児の先天性尿道狭窄に対する直視下内尿道切開. *日泌尿会誌* **80**: 704-710, 1989
- 8) Nonomura K, Kanno T, Kakizaki H, et al.: Impact of congenital narrowing of the bulbar urethra (Cobb's collar) and its transurethral incision in children. *Eur Urol* **36**: 144-149, 1999
- 9) Dewan P: Re: Nonomura K, Kanno T, Kakizaki H, et al.: Impact of congenital narrowing of the bulbar urethra (Cobb's collar) and its transurethral incision in children. *Eur Urol* **36**: 144-149, 1999, *Eur Urol* **40**: 478-479, 2001
- 10) Scherz HC and Kaplan GD: Etiology, diagnosis, and management of urethral strictures in children. *Urol Clin North Am* **17**: 389-394, 1990
- 11) Podesta E, Di Rovasenda E, Di Noto C, et al.: Congenital strictures of anterior urethra in childhood. *Z Kinderchir* **43**: 62-63, 1988
- 12) Donnellan SM and Costello AJ: Congenital bulbar urethral strictures occurring in three brothers. *Aust N Z J Surg* **66**: 423-424, 1996
- 13) Narborough GC, Elliot S and Minford JE: Congenital stricture of the urethra. *Clin Radiol* **42**: 402-404, 1990

(Received on August 7, 2002)

(Accepted on October 26, 2002)